

Mucocele de la glandula submaxilar: a propósito de un caso

Submaxillary gland mucocele: presentation of a case

Fernando Boneu Bonet ⁽¹⁾, Enric Vidal Homs ⁽¹⁾, Aránzazu Maizcurrana Tornil ⁽²⁾, Javier González Lagunas ⁽³⁾

(1) Médico adjunto. Unidad de Cirugía Oral y Máximo-Facial. Hospital L'Esperit Sant. Santa Coloma de Gramanet

(2) Médico Interno Residente. Servicio de Cirugía Oral y Máximo-Facial. Hospital Universitario Valle Hebrón

(3) Médico adjunto. Servicio de Cirugía Oral y Máximo-Facial. Hospital Universitario Valle Hebrón. Barcelona (España)

Correspondencia / Address:

Dr. F. Boneu Bonet

C/ Provença 244, Esc A, 3º-2º 08008 – Barcelona (España)

Tfn.: 93 - 4535692

Fax: 973 – 283143

E-mail: fboneu@teleline.es

Recibido / Received: 6-10-2003 Aceptado / Accepted: 20-06-2004

Indexed in:

- Index Medicus / MEDLINE / PubMed
- EMBASE, Excerpta Medica
- Indice Médico Español
- IBECS

Boneu-Bonet F, Vidal-Homs E, Maizcurrana-Tornil A, González-Lagunas J. Submaxillary gland mucocele: presentation of a case
Med Oral Patol Oral Cir Bucal 2005;10:180-4.

© Medicina Oral S. L. C.I.F. B 96689336 - ISSN 1698-4447

RESUMEN

El mucocele es un término que incluye dos conceptos: el quiste de extravasación, que resulta de la ruptura del conducto de la glándula salival y el consiguiente derrame de la mucina en los tejidos blandos que rodean a dicha glándula, y el quiste de retención, que tiene su origen en la disminución o ausencia de la secreción glandular como consecuencia de la obstrucción del conducto de la glándula salival.

No se puede considerar al mucocele como un verdadero quiste, ya que su pared carece de revestimiento epitelial.

Este tipo de patología es muy común en las glándulas salivales menores (sobre todo en las labiales), pero es muy poco frecuente en las glándulas salivales mayores y en concreto, en la glándula submaxilar.

El presente trabajo expone el caso clínico de un mucocele de glándula submaxilar derecha, resuelto mediante tratamiento quirúrgico y revisa todas aquellas entidades con las que se debe establecer el diagnóstico diferencial.

Palabras clave: Glándula submaxilar, mucocele, lesión salivar quística.

INTRODUCCIÓN

El mucocele es un término que incluye dos conceptos: el quiste de extravasación, que resulta de la ruptura del conducto de la glándula salival y el consiguiente derrame de la mucina en los tejidos blandos que rodean a dicha glándula, y el quiste de retención, que tiene su origen en la disminución o ausencia de la secreción glandular como consecuencia de la obstrucción del conducto de la glándula salival (1).

No se puede considerar al mucocele como un verdadero quiste, ya que su pared carece de revestimiento epitelial.

Este tipo de patología es muy común en las glándulas salivales

SUMMARY

The term mucocele is referred to two concepts: the extravasation cysts resulting from salivary glandular duct rupture, with mucin leakage into the surrounding peri - glandular soft tissue, and the retention cysts, caused by a glandular duct obstruction and resulting in a decrease or even an absence of glandular secretion. Mucocele can not be considered as a true cyst because its wall lacks an epithelial lining.

These lesions are very common in the minor salivary glands (particularly in the labial glands), but are very infrequent in the major salivary glands – including the submaxillary glands.

The present study describes a clinical case of a right submaxillary gland mucocele resolved by surgical treatment and reviews the differential diagnosis with other clinical entities.

Key words: Submaxillary gland, mucocele, salivary cystic lesions.

INTRODUCTION

The term mucocele is referred to two concepts: the extravasation cysts resulting from salivary glandular duct rupture, with mucin leakage into the surrounding peri - glandular soft tissue, and the retention cysts, caused by a glandular duct obstruction and resulting in a decrease or even an absence of glandular secretion (1).

Mucocele can not be considered as a true cyst because its wall lacks an epithelial lining.

These lesions are very common in the minor salivary glands (particularly in the labial glands), but are very infrequent in the major salivary glands – including the submaxillary glands (1,2-6).

The present study describes a clinical case of a right submaxillary gland mucocele resolved by surgical treatment and reviews

menores (sobretodo en las labiales), pero es muy poco frecuente en las glándulas salivales mayores y en concreto, en la glándula submaxilar (1,2-6).

El presente trabajo expone el caso clínico de un mucocele de glándula submaxilar derecha, resuelto mediante tratamiento quirúrgico y revisa todas aquellas entidades con las que se debe establecer el diagnóstico diferencial.

CASO CLINICO

Paciente varón de 25 años que es remitido a la Unidad de Cirugía Oral y Máximo-Facial del Hospital de L'Esperit Sant (Santa Coloma de Gramanet, Barcelona, España), por la presencia de una tumoración blanda submaxilar derecha de seis meses de evolución, que ha cursado con episodios de inflamación o fluctuaciones de tamaño, no dolorosas ni relacionadas con la ingesta. La historia clínica no aporta ningún otro tipo de información. En la exploración física se encuentra una tumoración blanda submandibular derecha, no reducible, bien circunscrita, indolora y ligeramente móvil, de unos 2-3 cm. de diámetro. La palpación bimanual aporta la misma información, siendo la exploración de la cavidad oral normal, con un flujo salival procedente del conducto de Wharton derecho correcto. La rama mandibular del nervio facial no está afectada y no se hallan otras alteraciones. Se solicita una ortopantomografía cuyo resultado es anodino, así como una tomografía computerizada (TC) de la zona submandibular derecha que evidencia la presencia de una masa alargada, de aspecto quístico y unos 3 cm. de diámetro máximo. La masa se localiza anterior a la glándula submandibular derecha, lateral al músculo geniogloso y medial al músculo milohioideo. No se observa plano de separación tisular entre la glándula submaxilar y la superficie de contacto de la masa, pero sí existe separación radiológica entre la lesión y el resto de estructuras cervicales. La densidad de la tumoración es de aproximadamente 40 UH, compatible con un elevado contenido proteico o complicación previa (Fig. 1). Tras la introducción del contraste la pared presenta un mínimo realce sugestivo de episodio de infección o sangrado previo. No se observa litiasis ni en el conducto de Wharton ni intraglandularmente. El diagnóstico diferencial se establece entre mucocele y quiste salival; se descarta ranula al no observarse comunicación entre la masa cervical y el espacio sublingual.

Se realiza, bajo anestesia general, la exéresis-biopsia de la masa de aspecto quístico, juntamente con una submaxilectomía derecha (Fig. 2).

El estudio histológico de la pieza quirúrgica revela la existencia de una pared quística sin revestimiento epitelial, con tejido de granulación y abundantes macrófagos espumosos en la pared, compatible todo ello con un mucocele de la glándula submaxilar (Fig. 3).

El paciente es dado de alta a las 24 horas de la intervención, permaneciendo asintomático y siguiendo controles periódicos en consultas externas.

DISCUSION

En pacientes con una masa cervical, el protocolo diagnóstico de nuestro centro contempla la realización de estudio de imagen

the differential diagnosis with other clinical entities.

CASE REPORT

A 25-year-old male was referred to the Oral and Maxillofacial Surgery Unit L'Esperit Sant Hospital (Santacoloma de Gramanet, Barcelona, Spain) with a soft tumor mass located in the right submaxillary region. The lesion had been present for the previous six months and showed inflammatory episodes or fluctuations in size, without pain and unrelated to food ingestion. The clinical history was otherwise unremarkable.

The physical examination revealed a soft, non-reducible right submandibular mass. The lesion was well circumscribed, painless, slightly mobile and measured about 2-3 cm in diameter. Bimanual palpation yielded the same information, the oral cavity findings being normal, with normal right Wharton's duct salivary flow. The mandibular branch of the facial nerve was unaffected, and no other alterations were noted.

Orthopantomography of the lesion afforded no information, while computed tomography (CT) showed the presence of an elongated mass anterior to the right submandibular gland, of a cystic appearance and measuring about 3 cm in greater diameter. The lesion was located anterior to the submandibular gland, lateral to the genioglossal muscle and medial to the mylohyoid muscle. No separating tissue plane was observed between the submaxillary gland and the contact surface of the mass, though a radiologically manifest separation was identified between the lesion and the rest of the neck structures. The density of the lesion was approximately 40 HU, compatible with the presence of a high protein content or some prior complication (Fig. 1). Following contrast injection, the lesion wall showed minimally enhanced uptake, suggestive of some previous infectious or bleeding episode. There was no evidence of lithiasis either in Wharton's duct or within the gland. The differential diagnosis contemplated a salivary cyst or mucocele. No communication was observed between the cervical mass and the sublingual space, as a result of which a cervical ranula was discarded.

The cystic lesion was removed under general anesthesia, together with a right Submaxillectomy (Fig. 2).

The histological study of the surgical piece revealed a cystic wall lacking an epithelial lining, with granulation tissue and abundant foam cells within the wall. This picture was considered to be compatible with a submaxillary gland mucocele (Fig. 3).

The patient was discharged 24 hours after surgery, and remains asymptomatic. Periodic controls are programmed in the outpatient clinic.

DISCUSSION

In patients with a neck tumor mass, the diagnostic protocol in our center contemplates the performance of imaging studies (orthopantomography, CT, magnetic resonance imaging) and fine needle aspiration biopsy (FNAB). The differential diagnosis centers on those lesions which manifest as cystic masses in the submandibular region and are of congenital origin (branchial cyst, dermoid/epidermoid cyst, thyroglossal cyst and cystic hygroma) or acquired origin (mucocele, salivary duct cyst, sia-locele, pneumatocele, plunging ranula, abscesses and cystic



Fig. 1. TC evidencia la presencia de una masa quística de unos 3 cm. de diámetro de localización anterior a la glándula submaxilar derecha.
CT evidences the presence of a 3 cm. diameter mass, anterior to the right submandibular gland, showing a cystic appearance.

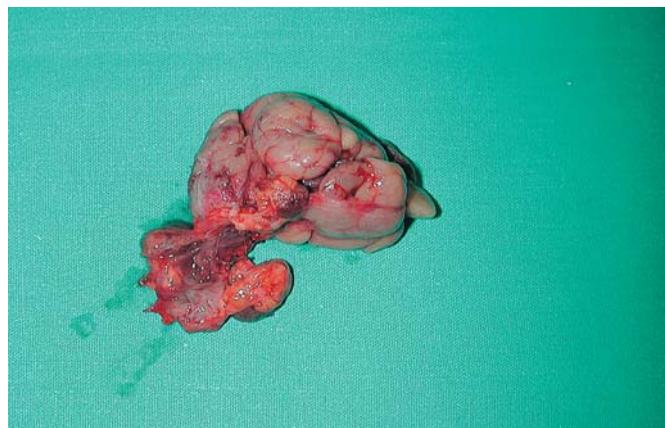


Fig. 2. Pieza quirúrgica que incluye la masa quística de 3 cm. de diámetro máximo juntamente con la glándula submaxilar derecha.
Surgical piece including 3 cm. diameter mass associated with right submaxillary gland.

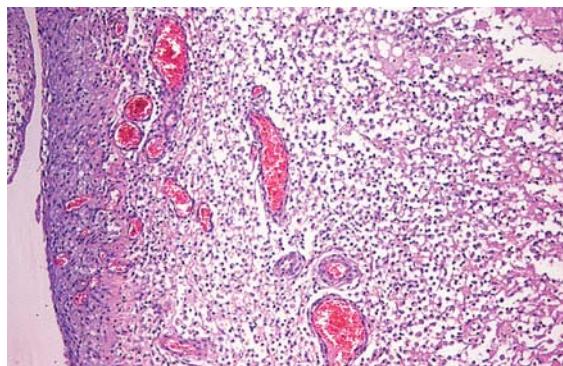


Fig. 3. Corte histológico compatible con mucocele donde se evidencia una pared quística sin revestimiento epitelial, tejido de granulación y abundantes macrófagos espumosos.
Histological image compatible with Mucocele: cystic wall lacking an epithelial lining, granulation tissue and abundant foam cells.

(ortopantomografía, TC, resonancia magnética) y punción – aspiración con aguja fina (PAAF). El diagnóstico diferencial se centra en aquellas lesiones que se manifiestan en la región submandibular como masas quísticas, bien de origen congénito

Tabla 1: Diagnóstico diferencial: Lesiones quísticas de origen salival.
Table 1: Differential diagnosis: Salivary cystic lesions.

Sialocele	Subcutáneo / Subcutaneous. Inmediato tras traumatismo / Immediate following trauma La sialografía confirma el diagnóstico / Sialography confirms diagnosis
Pneumatocele	Aire en parénquima glandular / Air in gland parenchyma
Ranula	Mucocele de la glándula sublingual / Mucocele of the sublingual gland
Plunging ranula	Mucocele de la glándula sublingual extendido a través del músculo milohioideo hasta ocupar el espacio submaxilar / Mucocele of the sublingual gland extending through mylohyoid muscle to occupy the submaxillary space El signo “de la uña” en TC permite la diferenciación / The CT “nail sign” facilitates differentiation

Tabla 2. Diagnóstico diferencial: Lesiones quísticas de origen no salival.
Table 2: Differential diagnosis: Non salivary cystic lesions

Quiste branquial / Branchial cyst	Pared quística clásica / Classical cyst wall Crecimiento lento / Slow growth Localización ángulo mandibular / Zone of mandibular angle
Quiste dermoide / Dermoid cyst	Localización en línea media / Midline location Consistencia dura / Hard consistency
Quiste tiroglosso / Thyroglossal cyst	Localización en línea media / Midline location Diagnóstico mediante gammagrafía, TC y PAAF / Diagnosis: Gammagraphy, FNAB and CT
Higroma quístico / Cystic hygroma	Localización típica en triángulo posterior / Typically in posterior triangle

degeneration of a tumor mass) (1, 2).

Cystic lesions of the submaxillary gland are infrequent. A review of four large series comprising 504 submandibular tumors revealed only three cysts (1,3,4), while a review of the Anglo-Saxon literature yielded only 5 submaxillary mucoceles (1,2,5,6). In the review conducted by Valldosera of 47 tumors (64% benign), no cystic lesions were found (7).

Submandibular gland mucoceles must be differentiated from other cystic lesions of salivary origin that can also develop in this

(quiste branquial, quiste dermoide/ epidermoide, quiste tiroglosso e higroma quístico) o bien adquirido (mucocele, quiste de conducto salival, sialocele, pneumatocele, plunging ránula, abscesos y degeneración quística de una tumoración) (1,2)

Las lesiones quísticas de la glándula submaxilar son poco frecuentes. Una revisión de cuatro grandes series que comprenden 504 tumores submandibulares solo revelan 3 quistes (1,3,4) mientras que una revisión de la literatura inglesa únicamente pone de manifiesto 5 casos de mucoceles submaxilares (1,2,5,6). En la revisión dirigida por el Dr. Valldosera de 47 tumores (64% benignos) no se halla ninguna lesión quística (7)

Los mucoceles de glándula submandibular deben ser diferenciados de otras lesiones quísticas de origen salival que también pueden desarrollarse en esta zona (Tabla 1).

Anatómicamente tanto la plunging ranula como el mucocele submaxilar pueden ocupar el espacio submandibular y es clínicamente imposible distinguirlas. En estos casos TC es útil para establecer el diagnóstico, pudiéndose identificar el denominado signo de “ la imagen en uña” que es patognomónica de la ránula cervical . Esta imagen se corresponde con una extensión entre la lesión y la glándula sublingual, siendo posible observarla en el margen posterior del músculo milohioideo o en una dehiscencia del mismo (8,9). Cuando este signo está ausente y se identifica un mucocele en íntimo contacto con el parénquima de la glándula submaxilar, se debe asumir que el origen es submaxilar (6). El diagnóstico diferencial también debería incluir otras lesiones quísticas de diferentes orígenes (Tabla 2). En estos casos, el diagnóstico diferencial puede establecerse mediante TC y PAAF (9,10). No obstante, la posibilidad de establecer un diagnóstico diferencial mediante TC queda limitada por la densidad relativa específica de la lesión submandibular: muchos tumores epiteliales son radiológicamente homogéneos y presentan una densidad cercana a la muscular, mientras que otros son radiológicamente heterogéneos, presentando áreas de necrosis o calcificación. Todas estas lesiones presentan una pared bien definida. El tumor de Warthin puede presentar áreas de menor densidad y los ganglios linfáticos metastásicos pueden aparecer con zonas necróticas o de baja densidad e incluso presentar distintos grosores de pared. De todas maneras, no suelen existir ni adenopatías intraglandulares ni el tumor de Warthin suele presentarse a nivel submaxilar. La mayoría de lesiones salivales contienen saliva que en muchos casos es accesible a PAAF. Las lesiones lipomatosas muestran una baja densidad radiológica, mientras que los tumores de origen neural suelen ser más densos radiológicamente y presentan zonas necróticas en su interior (1). En cuanto a la patogénesis de estas lesiones, existen dos teorías o mecanismos de formación que son la clave para distinguir y hacer un primer diagnóstico diferencial entre mucocele y quiste de retención mucoso. Parece ser que la obstrucción parcial del conducto salival (debido a mecanismos inflamatorios, cálculos o tumores) con la consiguiente dilatación sin ruptura del conducto, da lugar a la formación de un quiste salival verdadero, con pared quística revestida de epitelio, conocido también como quiste de retención mucoso, sialoquiste, etc...(1,2,10,11) El 96% de estas lesiones aparecen en las glándulas salivales mayores y en sujetos de mayor edad que el mucocele, aunque clínicamente son dos entidades indistinguibles (10). Por el contrario, la rotura

region (Table 1). Anatomically, both plunging ranula and submaxillary mucoceles can occupy the submandibular space, and it is clinically impossible to distinguish between them. In such cases CT is useful for establishing a diagnosis and may identify the so-called “nail image”, which is pathognomonic of cervical ranula. This sign corresponds to an extension between the lesion and the sublingual gland and can be observed in the posterior margin of the mylohyoid muscle or a dehiscence of the latter (8,9). When this image is missing and a mucocele is identified in intimate contact with the submaxillary gland parenchyma, the origin should be presumed to be submaxillary (6).

The differential diagnosis should also include other cystic lesions of different origins (Table 2). In such cases, the differential diagnosis can be established by CT and FNAB (9,10) However, the possibility of establishing a differential diagnosis with CT is conditioned by the relative density of the submandibular lesion: many epithelial tumors are radiologically homogeneous and present a density close to that of muscle; in contrast, other epithelial tumors are not homogeneous and present necrotic and calcified areas. All such lesions invariably exhibit a well defined wall. Warthin's tumor can present areas of lesser density, and the metastatic lymph nodes can appear with necrotic or low-density zones, or even present variable wall thicknesses. In any case, intraglandular adenopathies are not usually found, and Warthin's tumor moreover does not usually present at submaxillary level. Most salivary lesions contain saliva, which in many cases is accessible to FNAB.

Lipomatous lesions in turn show a low radiological density, while tumors of neural origin tend to be more radiodense and contain necrotic zones (1).

As regards the pathogenesis of these lesions, two theories or mechanisms have been proposed to distinguish between mucoceles and mucous retention cysts. Partial obstruction of the salivary duct (due to inflammation, calculi or tumor growth), with subsequent duct dilatation (but not rupture) appears to give rise to a true salivary cyst, with epithelial lining of the cyst wall, also known as a retention cyst, sialocyst, etc. (1,2,10,11). By far most of these lesions (96%) affect the major salivary glands, and the patients are typically older than in the case of mucocele – though the two lesions are clinically indistinguishable (10).

In contrast, duct rupture (often caused by trauma or previous surgical interventions) directly produces extravasation or leakage of the mucous contents and infiltration of the surrounding soft tissues, with a secondary inflammatory response and the formation of granulation tissue. This gives rise to a pseudocyst lacking an epithelial lining, also referred to as a mucocele or mucous extravasation phenomenon (1,2,10,11).

A number of authors have attempted to clarify the pathogenesis of mucous retention cysts, relating them to spontaneous changes in the eosinophilic - oncocytic epithelium, or describing them as a cystic form of papillary cystadenoma (12). Other authors consider oncocytic metaplasia in retention cysts to be the response to partial duct obstruction (13-15).

The case presented constitutes an unusual example of submaxillary mucocele. The diagnosis is mainly based on clinical and radiological evaluation of the lesion. In this sense, both CT

del conducto salival (causado frecuentemente por traumatismos o antecedentes quirúrgicos previos) produce directamente una extravasación o derrame del contenido mucoso e infiltración de los tejidos blandos circundantes, incitando una respuesta inflamatoria, así como formación de tejido de granulación, constituyendo así un pseudoquiste sin epitelio de revestimiento, también conocido como mucocele o fenómeno de extravasación mucoso (1,2,10,11).

Diversos autores han tratado de profundizar en la patogenia del quiste de retención mucoso, relacionándolo con cambios espontáneos en el epitelio eosinofílico-oncocítico, o describiéndolo como una forma quística de un cistoadenoma papilar (12). Otros autores creen que la metaplasia oncocítica en los quistes de retención es la respuesta a la obstrucción parcial del conducto (13-15).

El presente caso es un infrecuente ejemplo de mucocele submaxilar. El diagnóstico se basa principalmente en la evaluación clínica y radiológica de la lesión. Tanto TC como la resonancia magnética son útiles para determinar la localización y posible origen de la lesión, facilitando el diagnóstico diferencial con otras patologías como ránula y/o ránula cervical. La ortopantomografía y sialografía suelen ofrecer poca información. Mediante PAAF es posible identificar la composición del material quístico, observándose la presencia de abundante amilasa y proteínas tipo mucina.

Se han propuesto varias opciones de manejo de los mucoceles cervicales, incluyendo maniobras conservadoras como la aspiración (con el riesgo de derrame o daño de estructuras importantes), la inyección de agentes esclerosantes, irradiación, marsupialización y drenaje de la cavidad quística. A su vez, las diversas opciones quirúrgicas comprenden la exéresis de la lesión y de la glándula submaxilar, o incluso la exéresis del mucocele, de la glándula submaxilar y sublingual, mediante un abordaje cervical puro o una combinación de abordaje cervical e intraoral.

Debido a que el 90% de todos los mucoceles son quistes de extravasación, carentes de revestimiento epitelial, la exéresis del quiste no es obligatoria y no está exenta de posibles complicaciones. Se requiere la extirpación completa de la glándula origen de la lesión, para prevenir recidivas.

En nuestra opinión, en casos de mucocele submaxilar, es necesario resear la lesión y la glándula submaxilar, mediante un abordaje clásico de submaxilectomía. En el caso de que los hallazgos clínicos o radiológicos indiquen que el mucocele afecta o está en íntimo contacto con la glándula sublingual, ésta última debiera ser resecada con la finalidad de disminuir el riesgo de recidivas.

and magnetic resonance imaging are able to define the location and possible origin of the lesion, facilitating the differential diagnosis with other pathologies such as ranula and/or cervical ranula. Orthopantomography and sialography usually offer little information, however. FNAB can identify the composition of the cyst contents, revealing the presence of abundant amylase and proteins such as mucin.

Numerous management options have been proposed for treating cervical mucoceles, including conservative approaches such as aspiration (with the risk of damaging important structures or relapse), the injection of sclerotizing agents, irradiation, marsupialization and drainage of the cyst cavity. On the other hand, the proposed surgical options comprise simple exeresis of the lesion and of the submaxillary gland, or even exeresis of the mucocele, submaxillary gland and sublingual gland adopting a transcervical approach or combining a transcervical and transoral approach. Since 90% of all mucoceles are extravasation cysts lacking an epithelium, cyst exeresis is not obligate, and moreover may prove complicated or incomplete. Total removal of the gland originating the lesion is required, however, in order to prevent relapses.

In our opinion, in cases of submaxillary mucocele, it is necessary to resect the lesion and submaxillary gland, adopting a classical submaxillectomy approach. In the event the clinical or radiological findings indicate that the mucocele affects or is in intimate contact with the sublingual gland, the latter should also be removed in order to minimize the risk of relapse.

BIBLIOGRAFIA/REFERENCES

- Surkin M, Remsen K, Lawson W. A mucocele of the submandibular gland. Arch Otolaryngol 1985;11:623-5.
- Van der Goot A, Hermans R, Smet MH. Submandibular gland mucocele of the extravasation type. Report of two cases. Pediatr Radiol 1995;25:366-8.
- Simons JN, Beahrs OH, Woolner LB. Tumors of the submaxillary gland. Am J Surg 1964;108:485-94.
- Spiro RH, Hajdu SI, Strong EW. Tumors of the submaxillary gland. Am J Surg 1976;132:463-8.
- Hughes GW, Houston GD. Slow-growing midline submental mass. J Oral Maxillofac Surg 1999;57:61-5.
- Anastassov GE, Haiavy J. Submandibular gland mucocele. Diagnosis and management. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2000;89:159-63.
- Valldosera MA, González-Lagunas J, Raspaill G, Huguet M. Tumores de la glándula submaxilar. Estudio clínico-patológico. Revista Española de Cirugía Oral y Maxilofacial 1999; 21:115-8.
- Coit WE, Harnsberger RH, Osborn AG. Ranulas and their mimics: CT evaluation. Radiology 1987;163:211-6.
- Gosset JD, Smith KS, Sullivan SM, Harsha BC. Sudden sublingual and submandibular swelling. J Oral Maxillofac Surg 1999;57:1353-6.
- Raspall G. Cirugía Máxilo facial. Madrid: Editorial Médica Panamericana; 1997. p. 446-7.
- Neville BW, Damm DD, Allen CM. Oral and Maxillofacial Pathology. Philadelphia: W.B. Saunders Company; 1995. p. 322-6.
- Southam JC. Retention mucoceles of the oral mucosa. J Oral Pathol 1974;3: 197-202.
- Eversole LR, Sabes WR. Minor salivary gland duct changes due to obstruction. Arch Otol 1971;94:19-23.
- Capova L. Pneumatocele of the submandibularis gland. Cesk Otolaryngol 1975;24:1167-7.
- Parekh D, Stewart M, Joseph C. Plunging ranula: a report of 3 cases and review of the Literature. Br J Surg 1987;74:307-9.